



Disponible en ligne sur
ScienceDirect
www.sciencedirect.com

Elsevier Masson France
EM|consulte
www.em-consulte.com

REVUE FRANÇAISE
D'**Allergologie**

Revue française d'allergologie xxx (2013) xxx-xxx

Fait clinique

Trachéopathie ossifiante : diagnostic différentiel de l'asthme

Tracheopathia osteoplastica: Differential diagnosis from asthma

H. Jabri *, A. Aichane, W. El khattabi, H. Afif, Z. Bouayad

Service des maladies respiratoires, hôpital 20 Août 1953, CHU Ibn Rochd, rue Lahcen Arjoun, Casablanca, Maroc

Reçu le 30 mai 2013 ; accepté le 24 octobre 2013

Résumé

La trachéopathie ossifiante ou trachéobronchopathie ostéochondroplastique (TBOP) est une maladie rare d'étiologie inconnue, qui occasionne des manifestations pouvant simuler un asthme. Nous rapportons une observation colligée au mois d'octobre 2012. Il s'agit d'une patiente âgée de 47 ans suivie pour asthme sévère non contrôlé, hospitalisée suite à des épisodes d'hémoptysies minimales. L'examen clinique avait noté un *wheezing* et des râles sibilants diffus à l'auscultation. Le diagnostic de trachéopathie ossifiante a été soulevé devant les données de l'imagerie radiologique et l'aspect endoscopique caractéristique. Le traitement n'est que symptomatique.

© 2013 Elsevier Masson SAS. Tous droits réservés.

Mots clés : Trachéopathie ossifiante ; Asthme ; *Wheezing* ; Maladie rare ; Endoscopie bronchique

Abstract

Tracheopathia osteoplastica or tracheobronchopathia osteochondroplastica (TPO) is a rare disease of unknown etiology which causes symptoms that may mimic asthma. We report a case observed in October 2012. The 47-year-old patient, who was being followed for severe uncontrolled asthma, was hospitalized after episodes of minimal hemoptysis. Clinical examination revealed wheezing and sibilant rales on auscultation. A diagnosis of tracheopathia osteoplastica was made before the radiologic imaging data and endoscopic features were obtained. The only treatment is symptomatic.

© 2013 Elsevier Masson SAS. All rights reserved.

Keywords : Tracheopathia osteoplastica; Asthma; Wheezing; Bronchial endoscopy

1. Introduction

La trachéopathie ossifiante aussi appelée trachéobronchopathie ostéochondroplastique (TBOP) est une maladie rare d'étiologie inconnue, caractérisée par un dépôt de phosphate de calcium dans la sous-muqueuse de la paroi des voies aériennes centrales avec une prolifération bénigne de l'os et du cartilage. C'est une affection le plus souvent asymptomatique mais qui peut occasionner des manifestations pouvant simuler un asthme.

2. Observation

Madame E.R. est âgée de 47 ans, elle n'a pas d'habitudes toxiques et n'a pas d'atopie personnelle ni familiale. La

patientte rapportait depuis quatre ans des dyspnées sifflantes paroxystiques sans facteur déclenchant évident, prises au compte d'un asthme sévère non contrôlé malgré l'instauration d'un traitement de fond optimal (corticothérapie inhalée associée à un bronchodilatateur de longue durée d'action). Elle avait recours fréquent aux cures courtes de corticothérapie orale. L'évolution était marquée deux mois avant son hospitalisation par l'installation d'un *wheezing* associé à une hémoptysie de faible abondance sans douleur thoracique. La reprise de l'interrogatoire n'avait pas objectivé de syndrome de pénétration. L'auscultation du thorax avait perçu en plus du *wheezing* des discrets râles sibilants diffus.

Après mise en condition de la patientte, une radiographie thoracique (Fig. 1) était réalisée objectivant une réduction du calibre et un aspect sinueux de la lumière trachéale associés à une distension thoracique.

* Auteur correspondant.

Adresse e-mail : hasnajibri@hotmail.fr (H. Jabri).

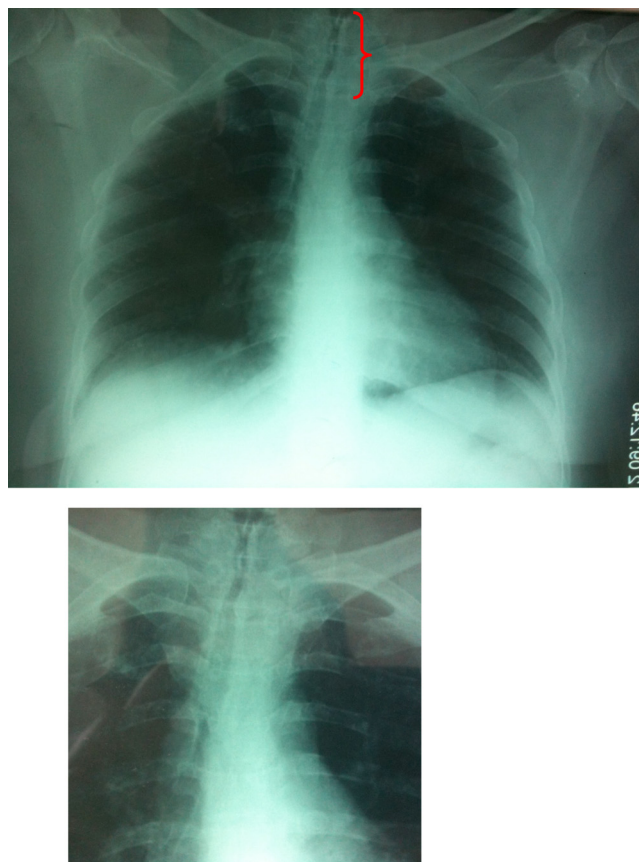


Fig. 1. Radiographie du thorax face : aspect sinueux de la lumière trachéale.

À cette étape, devant l'hémoptysie et le *wheezing*, nous avons discuté une tumeur trachéale (bénigne, maligne, carcinoïde), un corps étranger inhalé quoique l'interrogatoire n'avait pas trouvé de syndrome de pénétration. Une pathologie dégénérative de la trachée, notamment une trachéopathie, paraissait très probable vu le *wheezing*, l'aspect radiologique et la conservation de l'état général. Enfin, nous avons soulevé le diagnostic d'une amylose trachéale ou atteinte trachéale dans le cadre d'une maladie de système, notamment une sarcoïdose, une sclérodermie, ou une dermatomyosite.

L'exploration fonctionnelle respiratoire avait montré un aplatissement de la courbe débit-volume (Fig. 2) avec un trouble ventilatoire obstructif sévère irréversible après l'administration de bêta 2 mimétiques. Pour avancer dans notre discussion diagnostique, la tomodensitométrie thoracique (Fig. 3) avait mis en évidence des calcifications trachéales étagées en fer à cheval associées à des nodules rendant la lumière trachéale irrégulière par endroit. Ces lésions prennent naissance au niveau de la partie antérieure, c'est-à-dire cartilagineuse de la trachée ainsi que celle des parties initiales des deux bronches principales. Cet aspect est pathognomonique de la trachéopathie ossifiante.

La bronchoscopie souple avait confirmé ce diagnostic en objectivant un aspect irrégulier de la muqueuse bronchique fait de dépressions et de surélévations avec présence de bourrelets cartilagineux saillants. Cet aspect concerne aussi bien la trachée, qui est sujette à une sténose, que les bronches souches

qui sont de calibre réduit (Fig. 4). La bronchoscopie rigide était indiquée dans le but de réaliser des biopsies. Nous n'avions pas isolé de germes à l'étude microbiologique du liquide d'aspiration bronchique. L'étude anatomopathologique des biopsies réalisées avait montré une muqueuse malpighienne à revêtement papillomateux acanthosique modérément kératosique, dépourvue d'atypie cellulaire et renferme des calcifications dystrophiques témoignant d'une inflammation trachéale

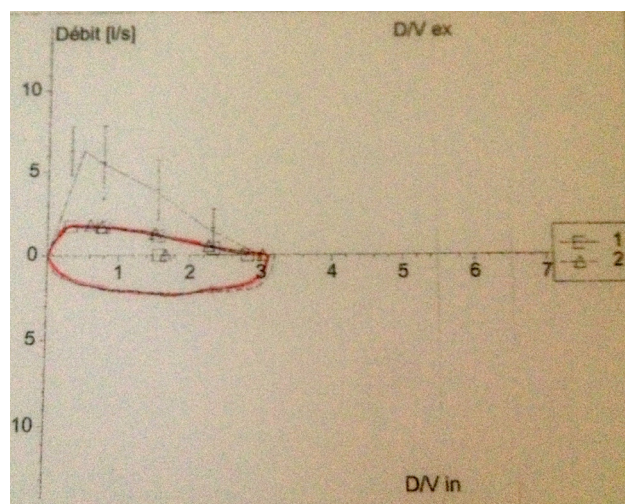


Fig. 2. Aplatissement de la courbe débit-volume.

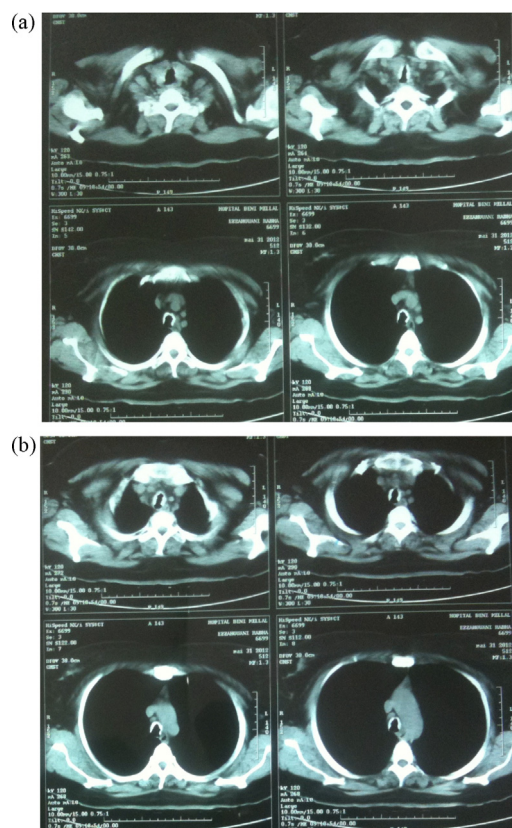


Fig. 3. a : TDM thoracique : calcification en fer à cheval de la trachée ; b : épaississement de la paroi antérieure de la trachée avec nodules faisant saillie dans la lumière trachéale.

chronique calcifiante. Une coloration au rouge Congo des biopsies était négative.

Le traitement est symptomatique, la patiente est stable cliniquement. Elle est régulièrement suivie à la consultation avec un recul de 12 mois.

3. Discussion

La trachéopathie ossifiante, aussi appelée trachéobronchopathie ostéochondroplastique (TBOP), est une pathologie peu fréquente et bénigne [1,2]. Elle a été décrite pour la première fois par Wilks en 1857 et par Rokitsansky en 1861. Son incidence est très faible puisqu'elle est de l'ordre de 0,02 % à 0,7 % [3] chez les patients ayant eu une bronchoscopie systématique pour une symptomatologie respiratoire, ce qui suppose que cette incidence est largement sous-estimée. Cette pathologie se rencontre le plus souvent chez le sujet de sexe masculin (sex-ratio : 3/1), vers l'âge de 50 ans [4]. Notre observation a concerné une patiente de sexe féminin.

La découverte est le plus souvent fortuite [5]. Les signes cliniques sont loin d'être spécifiques tels que la toux, l'hémoptysie [2], la dyspnée, la dysphonie, le *wheezing* et l'asthme qui peut être sévère. Dans ce dernier cas de figure, l'absence d'atopie personnelle ou familiale, l'âge tardif de l'apparition des signes cliniques de l'asthme, l'absence de facteur déclenchant ou d'autres signes d'allergie doivent faire attirer l'attention du clinicien vers l'un des diagnostics différentiels de l'asthme. Les investigations spirométrique et radiologique viennent par la suite infirmer ou affirmer le diagnostic d'asthme « non contrôlé ». Dans la majorité des cas des TBOP, les explorations fonctionnelles respiratoires objectivent un syndrome obstructif [6–8] non réversible sous bêta 2 mimétiques.

La radiographie thoracique standard peut révéler le diagnostic en montrant des irrégularités et un aspect sinueux de la lumière trachéale comme c'était le cas chez notre patiente. Cependant, elle peut être normale surtout dans les formes asymptomatiques [4]. La tomodensitométrie thoracique montre un épaississement des parois antérolatérales de la trachée, qui peut s'étendre vers les grosses bronches [2,9], des calcifications irrégulières de la paroi, des nodules qui contribuent à l'obstruction de la lumière trachéale voire des sténoses [1]. Enfin, la trachée peut être totalement déformée avec un aspect

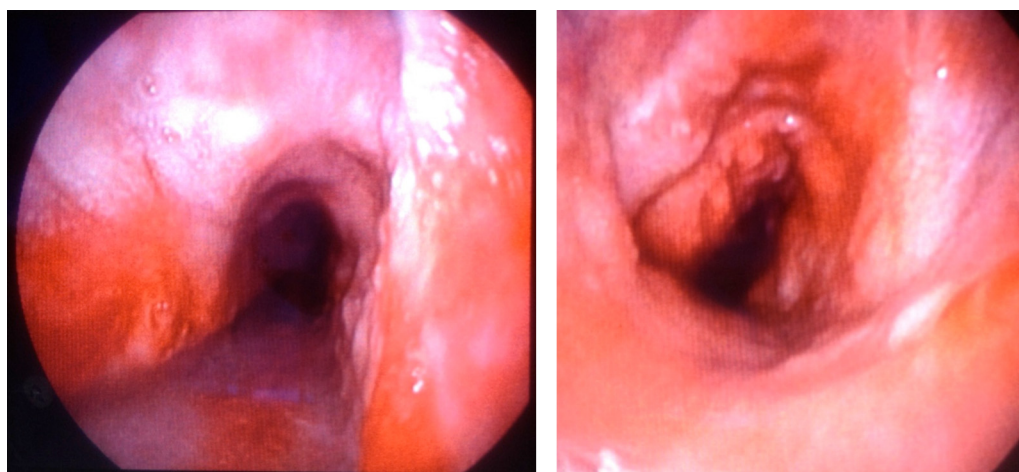


Fig. 4. Aspect per endoscopique/diminution du calibre de la lumière trachéale, muqueuse nodulaire irrégulière.

trifolié comme dans les observations rapportées par Saint Blancard et al. [10].

L'endoscopie vient affirmer le diagnostic, en montrant un aspect pathognomonique ; des calcifications irrégulières, des nodules plus ou moins confluents en plaques réduisant le calibre de la lumière trachéale, la muqueuse qui est pâle, atrophique mais jamais ulcérée. La sensation de crissement témoigne de la rigidité de la paroi trachéale, ce qui rend les biopsies difficiles et peu contributives. Cependant, la confirmation histologique n'est pas nécessaire pour retenir le diagnostic de la TBOP [2,4,10]. Malheureusement, dans notre observation il n'a pas été précisé la distance entre cordes vocales et l'atteinte trachéale ni le degré de la sténose de la lumière trachéale lors des gestes endoscopiques.

Sur le plan histologique, la TBOP est caractérisée par le dépôt de cartilage et d'os dans le chorion, indépendants des structures cartilagineuses normales de la paroi, la muqueuse est intacte [1,10].

Généralement, l'évolution est lente, le pronostic reste bon. Les formes sévères peuvent mettre en jeu le pronostic vital par un tableau d'insuffisance respiratoire aiguë. Les complications sont d'ordre infectieux, mécanique et rarement hémorragique [7,9]. Le traitement est symptomatique, il fait appel aux mucolytiques, humidificateurs, antibiotiques lorsque c'est nécessaire. Dans les formes sévères obstructives, la bronchoscopie interventionnelle permet la résection mécanique des nodules, ses résultats sont significatifs. La pose d'une prothèse trachéale est aussi envisageable, mais sans que le résultat ne soit assuré [4]. La chirurgie prend place dans les formes localisées [3]. La radiothérapie est d'indication limitée [5].

À ce jour, l'étiopathogénie de cette affection est encore énigmatique. Plusieurs hypothèses ont été avancées ; les facteurs les plus incriminés sont les infections ou irritations chroniques, et notamment le rôle du *Klebsiella ozaenae* [4,6]. Certains auteurs pensent que la trachéopathie ossifiante serait l'évolution ultime de l'amylose trachéo-bronchique [3].

4. Conclusion

La trachéopathie ossifiante est une maladie dégénérative rare dont les symptômes peuvent être pris pour un asthme sévère. Nous soulignons par cette observation l'intérêt de chercher les diagnostics différentiels de l'asthme avant de conclure à un asthme non contrôlé, ainsi que l'intérêt de mener des études pour clarifier l'étiopathogénèse de cette affection.

Déclaration d'intérêts

Les auteurs déclarent ne pas avoir de conflits d'intérêts en relation avec cet article.

Références

- [1] De wazières B, Fest T, Dalphin JC, Ranfaing E, Capellier G, Dupond JL. Tracheopathia osteoplastica associated with dermatomyositis. Case report. Rev Med Interne 1994;15:121–3.
- [2] Leske V, Lazor R, Coetmeur D, Crestani B, Châté G, Cordier JF. Tracheobronchopathia osteochondroplastica, a study of 41 patients. Medecine 2001;80:378–90.
- [3] Liétin B, Vellin JF, Bivahagumye L, Aumaitre O, kemeny JL, Mom T, et al. Trachéopathie ossifiante. Ann Fr Otorhinolaryngol Pathol Cervicofac 2008;125:208–12.
- [4] Dutau H. Trachéopathie ossifiante. Lett Pneumologue 2009;XII(1–2):28–30.
- [5] Tadjeddein A, Khorgami Z, Akhlaghi H. Tracheobronchopathia osteoplastica: cause of difficult tracheal intubation. Ann Thorac Surg 2006;81:1480–2.
- [6] Park SS, Shin DH, Lee DH, Jeon SC, Lee JH, Lee JD. Tracheopathia osteoplastica simulating asthmatic symptoms. Diagnosis by bronchoscopy and computerized tomography. Respiration 1995;62:43–5.
- [7] Bachy A, Saroul N, Darcha C, Bellini R, Mom T, Gilain L. Une cause inhabituelle de rétrécissement trachéal : diagnostic et prise en charge ? Ann Fr Otorhinolaryngol Pathol Cervicofac 2012;129(4):246–9.
- [8] Lundgren R, Stjernberg NL. Tracheobronchopathia osteochondroplastica. A clinical bronchoscopic and spirometric study. Chest 1981;80:706–9.
- [9] Tibesar RJ, Edell ES. Tracheopathia osteoplastica: effective long-term management. Otolaryngol Head Neck Surg 2003;129:303–4.
- [10] Saint blancard P, Natali F, Valeyt F, Coutant G, L' Her P, Le Vagueresse R. Trachéobronchopathie ostéochondroplastique : cinq observations. Rev Med Interne 1997;18:882–7.